下咽頭、頸部食道リンパ管腫の1例

*新井 峻, **木内 宗甫

Lymphangioma of the Hypopharynx and Cervical Esophagus

Takashi Arai, M.D.

Department of Otolaryngology, Kasumigaura National Hospital, Tsuchiura

Sousuke Kiuchi, M.D.

Institute of Clinical Medicine, Tsukuba University, Ibaraki

We reported a case of lymphangioma extended from the hypopharynx to the cervical portion of the esophagus. Such tumor arising in these regions is exceedingly rare, yet only 4 other cases have been previously reported in the literature. Out of the 4 cases, 3 had esophageal involvement and the remaining 1 had the lesion limited to the hypopharynx.

The present case was a 32-year-old man with a history of dysphagia. Indirect laryngoscopy revealed a cystic swelling of the posterior portion of the left arytenoid region, while any other remarkable changes could not be obtained. Contrast radiographies of the larynx, hypopharynx and esophagus demonstrated a deformity in the left arytenoid region, irregularities in the mucosal pattern and a large rounded filling defect in the cervical esophagus. Endoscopically, yellowish translucent cystic swellings were seen projecting into the lumens of the hypopharynx and cervical esophagus. A histopathological study confirmed the diagnosis as cavernous lymphangioma.

As a rule, surgical extirpation is the treatment of choice for this lesion, but it compells the patient to demand the loss of function, particularly such as of the larynx. For this reason, we selected to try cryosurgery, although it has not demonstrated an overall effectiveness sufficient to replace the surgical excision.

The patient is now approximately 7 months post-treatment without dysphagia. However, our result with this procedure has not been satisfactory for a permanent relief.

Key words : lymphangioma, hypopharynx, cervical esophagus, cryosurgery

I. 緒 言

リンパ管腫は身体各部に発生し、このうちではとくに頭頸部領域に多くみとめられる。しかしながら、消化管に発生することは少なく、私たちの調べ得た範囲では下咽頭に関しては1例の報告があるにすぎず、食道については3例の報告をみるのみである。

私たちは左披裂部後面の下咽頭より頸部食道

(切歯より17 cm)にかけて左側ほぼ半周にわたるリンパ管腫症例を経験したので報告する。

II. 症例および経過

患者: 32歳, 男性

主訴: 嚥下痛

既往歴, 家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 1979年7月初旬より嚥下痛生じ、7月19日国立霞ヶ浦病院耳鼻科を受診した。その際、視診上左側披裂部の浮腫状発赤と腫脹が著明であったため抗生物質の投与を行ったが、症

*国立霞ヶ浦病院耳鼻咽喉科

**筑波大学臨床医学系

図 1 喉頭ファイバースコープ所見

状軽減せぬため7月23日入院した。

入院時所見：全身的には頸部に腫脹，圧痛部位はなく，胸，腹部も正常であった。血液一般検査では白血球増多などなく，尿検査，肝機能検査も異常ない。視診所見では耳，鼻，咽頭には異常なかったが，喉頭は左披裂部の浮腫状発赤腫脹が著明であった（図1）。披裂部膿瘍を疑い，喉頭直達鏡下に嚢腫様腫脹部位に穿刺，小切開を行ったが，とくに内容液の排出はみられなかった。8月4日，間接喉頭鏡下に左披裂部後面の腫脹部位より生検を行ったところ，病理組織診断は出血を伴うリンパ管腫であった。

喉頭，下咽頭，食道のX線造影検査では，喉頭は左披裂部の腫脹による変形がみとめられるが，声門，声門下，気管は正常であった。側面像では下咽頭，食道入口部，頸部食道は，第7頸椎前面までのレリーフの乱れが著明であった（図2，3）。また，造影剤通過時には前壁の陰影欠損がみとめられた（図4）。正面像では第7頸椎前面の頸部食道レリーフに大きな球状陰影がみとめられた（図5）。

抗生物質，消炎剤，副腎皮質ホルモン（デキサメサゾン総量 20mg）の投与により症状軽減した8月23日，入院後1ヵ月目に全身麻酔下に食道直達鏡検査を行った。腫瘍は左披裂部後面の梨子状窩より始まり上切歯から17cmに至るまで左側ほぼ半周にみられ，多数の嚢腫状隆起とともに17cm附近では有茎性孤立性のものもみられた（図6）。胸部食道以下は正常であった。

図 2 喉頭造影側面像

図 3 下咽頭，頸部食道造影側面像

図 4 下咽頭，頸部食道造影剤通過時側面像

図 5 下咽頭，頸部食道造影正面像

これらの囊腫状部分からの生検では，上皮下に拡張性のリンパ管増生がみられ，リンパ管腫との診断であった（図 7，8）。

嚥下痛，嚥下困難が改善されたため 9 月 2 日国立霞ヶ浦病院耳鼻科を退院した。

しかし，腫瘍は増大傾向は示さないながらも存続したため，1980 年 2 月 12 日に筑波大学附属病院耳鼻科に入院し，気管切開，全身麻酔下にリンパ管腫に対する凍結手術を行った。凍結手術の方法は，下咽頭腫瘍部分には喉頭直達鏡下に，また食道入口部および頸部食道部分には上部食道鏡下に凍結プローベを圧抵し，条件は -160°C ，5 分間を 3 回ずつ行った。凍結部分の術後浮腫のため栄養ゾンを挿入し，気管カニューレを留置した。術後 40 日目に栄養ゾンを抜去し，ついで気管切開孔を閉鎖し 4 月 17 日退院した。

退院後 7 ヶ月を経過しとくに嚥下障害，呼吸障害などの訴えはないが，左披裂部後面の腫脹および下咽頭，頸部食道のレリーフの乱れがみとめられ，腫瘍は残存しているが現在経過観察中である。

図 6 食道直達鏡所見（切歯下 17 cm）

Ⅲ. 考 按

下咽頭の良性腫瘍は稀であり，その組織型は線維腫が多く，その他にポリープ，脂肪腫，乳頭腫，囊腫，血管腫，神経鞘腫，内被細胞腫，奇形腫，線維血管腫の報告⁸⁾⁹⁾¹³⁾がみられる。リンパ管腫に関しては，白戸ら¹⁶⁾が扁桃下部より下咽頭側壁にかけての腫瘍をみとめ，摘出の結果径 6 cm の卵球状腫瘍で組織所見はリンパ管腫と血管腫の像をあわせもった管腫であったと

報告している。私たちの調べた範囲では下咽頭リンパ管腫の報告は本報告例以外にはみられない。

食道の良性腫瘍はやはり稀であり、そのうちで頻度の多いものは平滑筋腫であり、その他に横紋筋腫、血管腫、ポリープ、乳頭腫、粘液腫、嚢腫、脂肪腫、神経線維腫、粘液線維腫、線維脂肪腫の報告⁶⁾⁷⁾¹¹⁾がある。リンパ管腫に関しては、症例報告として3例¹⁾³⁾¹⁴⁾、病理解剖の際に発見された1例⁶⁾をみるのみである。

これらの食道リンパ管腫症例報告3例は、いずれも切歯下30cm附近の胸部食道に発生し、Brady, Armengol-Miroの症例は胃潰瘍があり、その検査の際に発見されている。夏田の症例は嚥下困難を主訴とし、アカラシア兼食道静脈瘤の疑いにてThal-Hatafuku術施行時に発見されている(表1)。

本症例のリンパ管腫は、その初発部位が下咽頭、食道入口部、頸部食道のどの部位であったかは不明であるが、私たちの調べた範囲では、この部に発生したリンパ管腫の報告はなく、きわめて稀な症例と思われる。

リンパ管腫は、リンパ管内皮細胞をもった管腔の増生または拡張して腫瘤を形成したものをいい、リンパ管の存在するところにはどこにでも発生しうる。とくに頻度の多い部位は頸部であり、その他に唇、頬部、舌、口腔底、咽頭、四肢、縦隔、大網、肝、脾、副腎、腎などの報告があり、消化管としては食道、胃、腸管などにもみられる⁴⁾¹²⁾¹⁸⁾¹⁹⁾。

リンパ管腫は病理組織学的に次のように分類される¹⁵⁾。

1) 毛細リンパ管腫 capillary lymphangioma: うすい壁の小さなリンパ管の集合したもの。

2) 海綿状リンパ管腫 cavernous lymphangioma: 拡張した、しばしば線維性外膜をもつ

図7 上皮下に拡張したリンパ管の増生がみられ、周囲にはリンパ球の集簇が散在する。(×13)

図8 (図7の拡大) 腔の内面をうすい内皮がおおっているが、壁の構造はほとんどみられない。(×66)

表1 食道リンパ管腫報告例

報告者	報告年	発生部位
Brady, P.G. et al.	1973	胸部食道 切歯下30cmより5cmの長さで内腔に突出
Armengol-Miro, J. R. et al.	1979	胸部食道 切歯下約30cmの前壁に直径10mmのポリープ様のもの
夏田康則ら	1979	胸部食道 切歯下31cmよりEGJまでwhite varices様の隆起

た薄壁のリンパ管の集合したもの。

3) 嚢状リンパ管腫 cystic lymphangioma: 嚢状に拡張した数mmから数cmのリンパ腔からなり、嚢は互いに交通し、しばしば膠原線維や平滑筋線維を有する厚い壁によっておおわ

れている。

4) 全身性リンパ管腫症 systemic lymphangiomatosis: リンパ管腫が全身各所に同時にみられたり、身体の一領域に広範に生じたりするもの。

しかし、Batsakis²⁾ はリンパ管腫の組織分類の区別は解剖学的位置によって異なるにすぎず、リンパ管腔が拡張しやすい loose areolar tissue である側頸部、腋窩、臀部では嚢状となることが多く、拡張しにくい口唇、頬部、舌などは毛細性となり、口腔底はその中間型を示すことが多いとしている。

本症例のリンパ管腫は、粘膜下にみられるリンパ管腔の大きさからみて海綿状リンパ管腫といえる。

リンパ管腫の治療は、リンパ管腫が病理学的には良性腫瘍であるにもかかわらず臨床的には種々の組織（筋、血管、神経）間に浸潤性に発育するために、きわめて困難であることが多い。

手術療法（嚢腫摘出、切除）は最もよい方法であるが、顔面、頸部の嚢状リンパ管腫の場合しばしば摘出困難のことが多く、また術後のリンパ瘻形成、感染、神経麻痺を起すことが多い。これに対して消化管、腹腔のリンパ管腫は、その周囲の健常部分を含めて切除しうることが多く、報告されている症例も治療上の問題は少ないようである。

食道リンパ管腫報告例では、Brady ら³⁾ は胃部分切除を含む Billoth I 法の食道胃吻合を行い、Armengol-Miro ら¹⁾ は食道ファイバースコープ下に摘出後ジアテルミーを行い、夏田ら¹⁴⁾ は Thal-Hatafuku 術のみで切除したか否かは不明である。

腫瘍への薬剤使用は、その手術的困難さの故に古くから行われ、5% Sodium morrhuate の注入、ヨードチンキの塗布を始め種々の報告¹⁸⁾ があり、いずれも腫瘍の硬化を目的としている。しかし、この方法は腫瘍の壊死、出血、リンパ静脈吻合による薬剤の静脈内注入の危険性のために行われなくなったが、最近プレオマイシン²⁰⁾ またはプレオマイシンエマルジョン¹⁸⁾ の局注により嚢状リンパ管腫硬化のみとめられた症例が報告されている。

放射線療法は、口腔とくに舌リンパ管腫ないし macroglossia に主として行われた。管腔の閉塞を目的として外部照射やラジウム針の局所使用が行われたが、期待する効果は得られないことが多い。

良性、悪性腫瘍に対しての凍結手術の報告は多数あるが、この中で血管腫には有効性が高い。これに対してリンパ管腫は、法貴¹⁰⁾ によれば cryosensitivity において抵抗性がみとめられるとしており、また田中¹⁷⁾ も細胞成分が少なく間質の多い組織は凍結に対して抵抗性が強いとしている。しかし、Pfaltz ら⁵⁾ は喉頭入口部のリンパ管腫に対して凍結手術を行い、腫瘍の消失を報告している。

本症例の場合、リンパ管腫の存在する部位（下咽頭、食道入口部、頸部食道）からいって手術治療を行う際に健常な喉頭への侵襲を避けられず、また切除後の下咽頭、食道の再建には多分に困難さが予想されるために、不十分な効果が考えられたにもかかわらず凍結手術を試みた。また、本治療法を選んだ他の理由は、症例の年齢を考慮したことである。凍結手術の効果は腫瘍を消失させるには不十分であったが、現在患者の訴えはとくにないため、手術的治療を含めた本症例に対する適切な治療法とその時期について検討中である。

V. 結 語

嚥下困難を主訴とした左披裂部後面の下咽頭より頸部食道（切歯下 17cm）に至る海綿状リンパ管腫の 1 例を経験した。治療として、気管切開、全麻下に凍結手術を行い、現在経過観察中である。

現在までに下咽頭リンパ管腫の報告は 1 例、食道リンパ管腫は 3 例をみるのみで、本症例のごとく下咽頭、食道入口部、頸部食道にわたるリンパ管腫の報告はみられず、きわめて稀な症例と考えられた。

本論文の要旨は第32回日本気管食道科学会総会にて発表した。なお、本症例の診断、治療にあたりご協力をいただいた国立霞ヶ浦病院研究検査科病理堤寛医師、同院消化器科稲垣宏医師、同院耳鼻咽喉科結束温博士に深くお礼を申し上げます。

文 献

- 1) Armengol-Miro, J.R. et al.: Lymphangioma of the esophagus. Diagnosis and treatment by endoscopic polypectomy. *Endoscopy*, 3 : 185-189, 1979.
- 2) Batsakis, J.G.: Tumors of the Head and Neck. The Williams & Wilkins Co., Baltimore, pp. 301-304, 1979.
- 3) Brady, P.G. et al.: Lymphangioma of the esophagus-Diagnosis by endoscopic biopsy. *Am. J. Dig. Dis.*, 18 : 423-425, 1973.
- 4) Hall, E.M.: Blood and lymphatic vessels. *Pathology*. The C.V. Mosby Co., St. Louis, pp. 541-579, 1961.
- 5) Pfaltz, C.R. et al.: Kryo-Therapie bei Stenosen der Glottis und des subglottischen Raumes in Kindesalter. *Mschr. Ohr. hk.* 108 : 265-269, 1974.
- 6) Schmidt, H.W. et al.: Benign tumors and cysts of the esophagus. *J. Thoracic and Cardiovas. Surg.*, 41 : 717-732, 1961.
- 7) Ungerecht, K.: Oesophagus. Hals-Nasen-Ohrenheilk. Band 3. Georg Thieme Verlag, Stuttgart, pp. 15, 114-117, 1978.
- 8) 福田栄三・他: 巨大な下咽頭腫瘍(線維血管腫)の1例, 耳喉, 33 : 134-136, 1961.
- 9) 古市暢夫・他: 咽頭の良性腫瘍, 耳喉, 49 : 841-848, 1977.
- 10) 法貴昭: 神戸大学凍結外来における治療方針, 耳鼻臨, 68 : 1522-1524, 1975.
- 11) 池田茂人・他: 気管・気管支・食道の良性腫瘍, 耳喉, 49 : 865-872, 1977.
- 12) 伊藤隆夫・他: 下行結腸リンパ管腫の1例, 臨外, 32 : 515-518, 1977.
- 13) 岩本彦之丞: 下咽頭の腫瘍, 耳鼻咽喉科学, 下巻, 医学書院, 東京, p. 1606, 1971.
- 14) 夏田康則・他: きわめて稀れな食道巨大海綿状リンパ管腫の1例, 日消外会誌, 12 : 686, 1979.
- 15) 日本病理学会小児腫瘍組織分類委員会: 小児軟部組織腫瘍の組織分類, 日小外誌, 11 : 529-544, 1975.
- 16) 白戸勝・他: 下咽頭管腫の1症例, 日耳鼻, 81 : 507, 1978.
- 17) 田中茂男: (外科20年の歩み) Cryosurgery, 外科診療, 20 : 1455-1463, 1978.
- 18) 谷川允彦・他: 軟部腫瘍, 特に囊腫性リンパ管腫の治療, 外科治療, 39 : 419-426, 1978.
- 19) 山際裕史・他: 胃リンパ管腫の1例, 臨外, 31 : 1653-1655, 1976.
- 20) 由良二郎・他: 小児の頸部腫瘤, 特に囊腫状リンパ管腫と Bleomycin の効果について, 小児外科・内科, 8 : 279-285, 1976.

(別刷請求: 〒300茨城県土浦市下高津2-7-14)
国立霞ヶ浦病院耳鼻咽喉科
新井 峻)

(投稿受付 1981年2月5日)